

외상으로 인한 후복막 유건종 제거술 후 신경인성 통증의 재활치료

김기찬, 정호중

고신대학교 의과대학 재활의학교실

Rehabilitative Management of Neuropathic Pain after Excision of Retroperitoneal Desmoid Tumor following Trauma

Ghi Chan Kim, M.D., Ho Joong Jeong, M.D.

*Department of Physical Medicine and Rehabilitation,
Kosin University College of Medicine*

Abstract

Desmoid tumors are infrequent and histologically benign fibrous neoplasms originating from the musculoaponeurotic structures throughout the body. These tumors are found in areas of previous traumatic or surgical scarring. The compartment syndrome is considered a true emergency condition. The internal pressure rises so high that local circulation is cut off and the affected muscle dies. The local increased pressure can also damage associated nerves resulting in a loss of both power and sensation. Lumbosacral plexopathy is characterized by intense pain in one or both legs, associated with motor and sensory deficits. Proper medications including topiramate with physical therapy and psychological modalities are critical to successful outcome of the management for neuropathic pain. We experienced a case of rehabilitation for lumbosacral plexopathy and compartment syndrome following excision of retroperitoneal desmoid tumor due to trauma in 9 year-old child.

Key Words: Retroperitoneal desmoid tumor, Neuropathic pain, Topiramate

서 론

유건종(Desmoid tumor)은 근초나 근건막 구조물로부터 처음 발생하여 국소적으로 주위 조직을 강하게 침범하며, 불완전 제거 시 강한 재발성을 가지고 있으나 원격 전이는 하지 않는 특이한 신생물로 전체 고형 종물의 0.03%를 차지하는 매우 드문 신생물이다. 내분비 장애 및 임신, 외상, 유전적 결함 등이 발생원인으로 지적되고 있으며 외상과의 관계는 과거 수술을 받은 부위에서 발생 빈도가 높으나 물리적 손상을 받은 부위에서의 발생은

드물게 보고하고 있다.¹⁻³⁾

본 저자들은 국내에 보고 된 적이 없는 외상 후 발생한 후복막 유건종과 종양 절제술에 이은 구획 증후군과 허리엉치신경얼기병증으로 인한 보행 장애 및 신경병성 통증을 가진 9 세 환자의 재활 치료를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

키 132.5cm, 몸무게 35kg의 9세 여아로 3년 전 보행 중 대형 트럭과 부딪히는 교통사고로 인해 엉치엉덩관절(sacroiliac joint) 탈구 및 엉덩뼈오목(ilic fossa)의 혈종을 동반한 신우요관이행부(ureteropelvic junction) 파열로 본

교신저자 : 정 호 중
주소: 602-702 부산광역시 서구 압남동 34번지
고신대학교 복음병원 재활의학과
TEL : 051-990-6156
FAX : 051-241-2019
E-mail: jhjpnr@kosinmed.or.kr

원 비뇨기과에서 좌측 콩팥절제술을 시행 받았다. 이 후 외래 추적 관찰 중 점진적으로 발생한 우상복부 동통 때문에 시행한 후복막 컴퓨터 단층촬영(Fig. 1)에서 우측 엉덩 혈관들에 접해있는 후복막 종양이 발견되어 종양 절제술을 시행 하였으며 조직학적 검사에서 유건종으로 진단 받았다(Fig. 2). 수술 다음날 우측 하지에 부종을 동반한 운동 및 감각 장애를 호소하는 구획 증후군 소견이 관찰되어 실시한 혈관 조영술 검사에서 우측 온영덩동맥(common iliac artery)의 협착 소견을 확인하고 혈관 재건술 및 근막절제술을 실시하였다. 수술 후 환아는 지속적으로 우측 하지의 극심한 통증을 호소하여 Tramadol(Tridol[®]), Ketorolac(Tarasyn[®])과 함께 비스테로이드성 소염제를 투여하였으며 통증이 심한 경우 Morphine 10mg까지 투여하기도 하였으나 통증은 잘 조절되지 않았다.



Fig. 1. Contrast enhanced CT scan of 9 years-old girl shows well-circumscribed homogeneous ovoid mass(white arrow) at right inguinal fossa. The tumor separates the right iliac vessels.

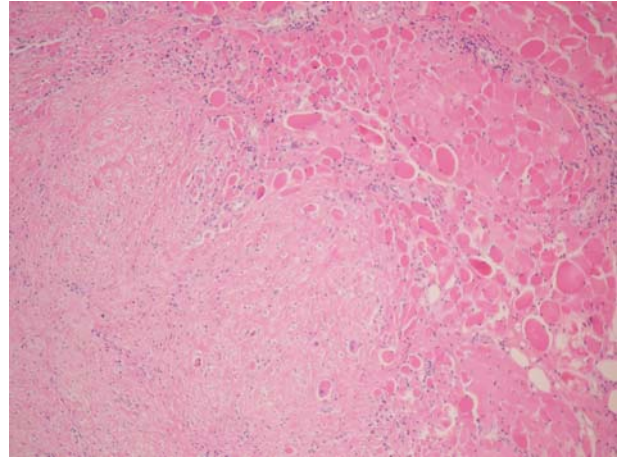


Fig. 2. Hypercellular spindled cells arranged in fascicular pattern infiltrate into adjacent skeletal muscle and fat tissue.(H&E stain, x100)

Table 1. Nerve Conduction Study on the Right Lower Limb

Nerve Stimulation (Record)	Amplitude(uV) Distal / Proximal	Conduction Velocity(ms)	Distance (cm)	Latencies Distal / Proximal
Motor				
Femoral	Absent / Absent	-	-	Absent / Absent
Tibial(AH)	Absent / Absent	-	-	Absent / Absent
Peroneal(EDB)	Absent / Absent	-	-	Absent / Absent
Sensory				
Sural(ankle)	Absent	-	-	Absent
H-reflex	Absent	-	-	Absent

AH: adductor hallucis; EDB: extensor digitorum brevis

Table 2. Electromyography on the Right Lower Limb

Muscle	Insertional Activity	Rest Activity Fibs / PSW	Motor Unit Recruitment	Potential Dur	Phases
Gluteus maximus	Increased	++ / +	Reduced	Long	Poly
Gluteus medius	Increased	++ / +	Reduced	Long	Poly
Adductorlongus	Increased	+++ / +	Reduced	Long	Poly
Tensor fascia lata	Increased	++ / +	Discrete		
Vastus medialis	Increased	+++ / +	Discrete		
Iliopsoas	Increased	++ / +	Reduced	Long	Poly
Semitendinosus	Increased	+ / +	Discrete		
Biceps femoris (short head)	Increased	++ / +	Discrete		
Tibialis anterior	Increased	+++ / +	Discrete		
EHL	Increased	+ / +	Discrete		
Peroneus longus	Increased	+++ / +	Discrete		
Medial gastrocnemius	Increased	+ / +	Discrete		
L1-S1 paraspinal region	Increased	Silent	Normal		

Fibs: fibrillations; PSW: positive sharp wave; Dur: duration; EHL: extensor hallucis longus

수술 후 8주에 계속되는 우측 하지 감각 소실 및 위약감과 함께 심한 통증으로 재활의학과로 전과되었다. 전과 당시 신체검사상에서 우측 하지의 종창과 약간의 열감 및 발적이 관찰되었고 도수 근력 검사에서 우측 고관절 굴곡과 신전의 근력이 모두 grade 2였고, 슬관절과 발목관절에서는 신전과 굴곡의 근력이 모두 grade 1이었다. 우측 하지 전체에 감각 저하 및 이상 감각이 있었으며 우측 슬부 건반사와 족관절 건반사는 감소되어 있었고 우측 슬관절은 거의 굴곡 되지 않을 정도의 관절 운동 제한이 있었으며, 신체검사가 시행되는 동안 가벼운 접촉에도 심한 통증과 불안감을 호소하였다. 전과 당일 시행한 우측 하지의 전기진단학적 평가에서 허리신경얼기에서 분지되는 넓다리, 정강, 종아리 및 장딴지 신경에서 시행한 신경전도 검사에서는 복합근 활동 전위(compound muscle action potential, CMAP)와 복합 감각 신경 활동 전위(compound sensory nerve action potential, SNAP)가 유발되지 않았고(Table 1), 위 신경들의 지배를 받는 근육들에서 시행한 침 근전도 검사에서는 탈신경(denervation) 소견이 관찰되어 허리엉치신경얼기 병증을 확인할 수 있었다(Table 2).

환아는 우측 하지에 약간의 접촉에도 Visual Analog Scale(VAS) 8-9 정도로 극심한 신경병성 통증(neuropathic pain)을 호소하였으며 전과 당시 장기간의 침상 안정으로 기립이 불가능하였고 정서적으로도 불안한 심리상태를 보였다. 정신과 협의진료를 의뢰하여 신체적 스트레스에 의한 적응장애로 진단 받고 지지적 정신치료를 시작하였으며 신경병성 통증에 대한 약물치료로 Amitriptyline 5mg, Topiramate 25mg을 하루 1회 투여로 시작하여 일주일 후 Topiramate 25mg을 하루 2회로 증량하였다. 하지 근력 강화 운동 및 관절 운동과 보행 연습을 포함한 적극적인 재활치료를 실시하였으며 전과 1개월 후 도수 근력 검사에서 우측 고관절 굴곡과 신전의 근력이 각각 grade 3, grade 2로 호전되었고 슬관절은 90도 까지 수동적 관절 운동이 가능하였으며 장하지 보조기(KAFO) 착용을 시작하였으며, 통증은 VAS 4-5 정도로 감소하였고 정서적인 불안감도 관찰되지 않았다. 전과 2개월째 VAS 0-1로 간헐적인 우측 하지 통증을 호소하였으며, 장하지 보조기를 착용하고 50m까지 보행이 가능하였다. 전과 3개월째 Amitriptyline와 Topiramate의

투여를 중지하여도 우측 하지 통증을 호소하지 않았고, 도수 근력 검사에서 우측 고관절 굴곡과 신전의 근력은 각각 grade 3, grade 2로 변화를 보이지 않았으나 장하지 보조기를 착용하고 독립 보행이 가능하였다.

고 찰

유건종은 1832년 John MacFarlane이 복부 종물로써 처음 보고하고 Muller가 band 또는 tendon-like를 의미하는 그리스어인 Desmos에서 기원한 유건종(Desmoid)이라는 용어를 1838년 처음 사용한 후 주로 근초나 근건막 구조에서 유래한 양성 연부 조직 종양으로 알려져 왔다. 하지만 종양의 병리 조직학적 분류와 종양 생물학적 양상, 치료 방법의 선택 등에 대하여 일치하지 않는 여러 보고가 있는 후로 전이를 일으키지 않는 low-grade fibrosarcoma 또는 양성과 악성의 중간 형태로 분류되기도 하였던 현재까지 잘 알려지지 않은 종양으로 빈도는 전체 고형종양의 0.03 %를 차지한다고 보고하고 있다.^{2,4)} 이 종양의 발생원인에 대하여는 아직 정확히 규명이 되어 있지 않으나 일반적으로 내분비 장애 및 임신, 외상, 유전적 결함 등이 발생요인으로 지적되고 있다. 외상과의 관계는 이 종양이 과거 수술을 받거나 물리적 손상을 받은 부위에서 발생빈도가 높아 Reitamo 등은 많게는 약 80 %까지의 증례에서 수술 상흔 인접부위에서의 발생을 보고하였다.³⁾ 본 증례에서는 3년 전 교통사고와 이로 인한 신우요관 이행부(ureteropelvic junction) 파열로 좌측 콩팥절제술을 시행 받았으며 유선종 발생부위가 우측인 것을 감안할 때 수술보다는 교통사고로 인한 외상이 유선종의 발생원인으로 생각된다.

구획 증후군은 폐쇄된 골건막 구획내의 조직압의 증가로 발생하는 미세혈액순환의 장애로 다양한 원인에 의해 발생될 수 있으며, 조기에 진단되어 적절한 감압조치를 시행하지 않으면 사지의 주요기능이 상실되는 심각한 후유증을 남길 수 있다.⁵⁾ Willis와 Rorabeck⁶⁾이 주장한 구획 증후군의 병리 기전에 의하면 조직압의 증가로 인해 구획으로부터 배출되는 정맥류가 차단되고 이로 인해 더욱 부종이 심해지면서 조직압이 더욱 증가되어 구획 내에서 근육과 신경에 대해 조직압이 소동맥 보다 높아지면 모세혈관 문압내로 더 이상 혈액이 공급되지 않아 근육과

신경의 허혈을 초래하고 구획내 구조의 비가역적 손상을 초래하게 된다고 설명하였으며, Holden⁷⁾은 구획 증후군의 가능한 두 가지 원인을 설명하였는데 제 1형은 근위부 동맥 손상으로 원위부에 허혈이 발생하는 것이고, 제 2형은 직접손상에 의해 중증의 부종과 허혈이 발생하는 것이라 하였다. 본 증례에서는 우측 온영덩동맥 손상으로 인한 원위부 하지의 허혈이 구획증후군 발생의 원인으로 생각된다.

허리엉치신경얼기병증은 위팔신경얼기병증과 비교하여 역학적 정보는 훨씬 적은 편으로 위팔신경얼기병증보다 드물게 보고 되고 있으며 방사선 치료를 받은 대장이나 부인과 종양을 가진 환자들에게 발생할 수 있다. 흔히 통증이나 감각이상 소견이 위약이나 근위축 같은 운동장애 증상보다 먼저 나타난다. 허리엉치신경얼기의 정확한 전기생리학적 평가는 진단과 치료적 관점에서 대단히 유용하여, 허리엉치신경얼기의 신경경로에 따른 자세한 생리학적 상태를 신경전도 검사와 침 근전도 검사를 통해 가장 잘 평가할 수 있고 이러한 자료들은 예후와 관련된 신경 기능장애의 유형과 정도에 대한 평가에 도움을 준다.⁸⁾ 이번 증례에서는 우측 하지의 전기진단학적 평가에서 허리신경얼기에서 분지되는 넙다리, 정강, 종아리 및 장딴지 신경에서 시행한 신경전도 검사에서 복합근 활동 전위와 복합 감각 신경 활동 전위가 유발되지 않았고, 이들 신경의 지배를 받는 근육들에서 시행한 침 근전도 검사에서 탈신경 소견이 관찰되어 허리엉치신경얼기병증을 확인할 수 있었다.

신경병성 통증은 신경계의 일차적인 병변이나 기능부전에 의해 유발되거나 시작되는 통증을 말하며 대부분 말초 신경계나 중추 신경계 손상에 의한 결과이다. 최근에 와서 신경병성 통증의 치료에 처방되기 시작한 Topiramate는 난치성 부분 간질 환자의 보조적인 치료제로 1995년 영국에서 처음으로 인가되었으며, 다양한 작용으로 신경병성 통증의 치료에도 사용이 증가하는 추세이다. 치료적 농도의 Topiramate는 신경 전달에 있어 첫째 나트륨 이온 전압 작동 통로(voltage-gated sodium ion channels)의 조정, 둘째 GABA 억제제의 상승작용, 셋째 흥분성 글루탐산염(glutamate) 신경전달의 차단, 넷째 칼슘 이온 전압 작동 통로(voltage-gated calcium ion channels)의 조정, 다섯째 탈산탈수소효소(carbonic anhydrase)의

억제와 같은 최소한 다섯 가지의 방법으로 작용한다.⁹⁾ Amitriptyline은 가장 잘 연구되어진 삼환계 약물로, 진통 효과를 얻기 위해서는 항우울에 필요한 용량보다 낮은 용량으로 사용되며 수면방식을 정상화하기 위한 진정작용의 이점을 얻기 위해 밤에 투여되기도 한다. 그러나 Amitriptyline은 급격한 혈압 상승의 원인이 될 수 있기 때문에 고혈압이나 관상동맥질환을 가진 환자에게는 주의해야 한다.¹⁰⁾

본 증례에서는 9세 여아에서 외상으로 인해 발생한 후복막 유건종 절제술 후에 나타난 우측 하지 감각 및 운동장애에 대해 전기진단학적인 평가로 허리엉치신경얼기병증을 진단하였고 신경병성 통증에 대해 적절한 약물치료를 시행하였으며 하지 근력 강화 운동 및 관절 운동과 보행 연습을 포함한 적극적인 재활치료를 통해 장하지 보조기를 착용하고 독립보행이 가능할 정도의 기능적 향상을 이끌어낼 수 있었다. 따라서 본 저자들은 교통사고 및 종양에 대한 수술과 이어지는 합병증으로 인한 신체적 장애와 정신적 고충에 대해 정확히 진단하고 적절한 약물치료와 적극적인 재활치료 및 지지적 정신치료가 특히 나이가 어린 환자의 기능적 향상에 있어 중요할 것으로 생각한다.

참고문헌

1. 김재형, 박영석, 권성준, 권오정, 정과중, 이광수, 박진영, 권규영, 원치규: 유건종(Desmoid Tumor)의 임상적 고찰. 대한외과학회지 54(3): 419-424, 1998
2. Easter DW, Halasz NA. Recent trends in the management of desmoid tumors. Summary of 19 cases and review of the literature. Ann Surg. 210: 765-769, 1989
3. Reitamo JJ, Scheinin TM, Hayry P. The desmoid syndrome. New aspects in the cause, pathogenesis and treatment of the desmoid tumor. Am J Surg. 151: 230-237, 1986
4. Shiu MH, Weinstein L, Hajdu SI, Brennan MF. Malignant soft-tissue tumors of the anterior abdominal wall. Am J Surg. 158: 446-451, 1989
5. 배성범, 서승석, 유현덕, 김영창, 최장석, 이영구: 급성 구획증후군의 임상적 고찰. 대한정형외과학회지 28(2): 641-653, 1993
6. Willis RB, Rorabeck CH. Treatment of compartment syndrome in children. Orthop Clin North Am. 21: 401-412, 1990
7. Holden CE. The pathology and prevention of Volkmann's ischaemic contracture. J Bone Joint Surg Br. 61-B: 296-300, 1979
8. Daniel D. Lumbosacral plexopathies and proximal

- mononeuropathies. In: Daniel D, Machiel JZ, editors. Electrodiagnostic medicine, 2nd ed, Philadelphia: Hanley & Belfus, 2002, 837-883
9. Chong MS, Libretto SE. The rationale and use of topiramate for treating neuropathic pain. Clin J Pain. 19: 59-68, 2003
10. Randall LB. Chronic pain syndrome. Evaluation and treatment. In: Donna B, Octavio C, Kevin S, Martin G, editors. Physical medicine and rehabilitation, 2nd ed, Philadelphia: Saunders, 2000, 913-933